



TITLE:

原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の 2例 : 本邦報告63例の文献的考察

AUTHOR(S):

入澤, 千晴; 濱崎, 隆志; 菅藤, 哲; 山田, 陽司; 近藤, 義政; 毛利, 淳; 千葉, 隆一; 山口, 脩; 白岩, 康夫

CITATION:

入澤, 千晴 ...[et al]. 原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の2例 : 本邦報告63例の文献的考察. 泌尿器科紀要 1994, 40(2): 169-173

ISSUE DATE:

1994-02

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/115193>

RIGHT:

原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の2例

—本邦報告63例の文献的考察—

福島労災病院泌尿器科（部長：千葉隆一）

入澤 千晴，濱崎 隆志，菅藤 哲¹⁾，山田 陽司

近藤 義政，毛利 淳²⁾，千葉 隆一

福島県立医科大学泌尿器科（主任：白岩康夫教授）

山口 脩，白岩 康夫

TWO CASES OF PRIMARY SCLEROSING LIPOGRANULOMA IN SCROTUM —REVIEW OF 63 CASES REPORTED IN JAPAN—

Chiharu Irisawa, Takasi Hamasaki, Satoru Kantou,
Youji Yamada, Yoshimasa Kondou,
Jun Mouri and Ryuuichi Chiba

From the Department of Urology, Fukushima Rousai Hospital

Osamu Yamaguchi and Yasuo Shiraiwa

From the Department of Urology, Fukushima Medical College

We reported two cases of primary sclerosing lipogranuloma in the scrotum. We performed tumor resection in both cases, but in one of the two cases tumor recurrence was observed 7 days after the removal.

Sixty-three cases have been reported in our country, and we discuss the diagnosis and treatment with reference to previous reports.

(Acta Urol. Jpn. 40: 169-173, 1994)

Key words: Primary sclerosing lipogranuloma scrotum

緒 言

原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫は、陰嚢内に特徴的なY字型をした肉芽腫が形成される稀なる良性疾患である。われわれが経験した2例を報告し、本邦報告63例の文献的考察を加える。

症 例

症例1：40歳，男性

主訴：陰嚢内無痛性腫瘤

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

現病歴：1992年2月14日，陰嚢中央部に小指頭大で可動性の無痛性腫瘤を触知する。2週間で急激に増大

したため，2月27日当科を受診，翌日陰嚢内腫瘍の診断にて手術目的に入院す。

現症：胸腹部理学的所見に異常なし。陰嚢に発赤なく，腫瘤の頭側は陰茎根部を取り巻き尾側は会陰部に連なるY字型の特異的な形態をしていた（Fig. 1）。弾性硬で圧痛なく精巣や精索とは独立し，前立腺にも異常を認めなかった。

入院時検査成績：血沈 8 mm/h・12 mm/2 h. 末梢血中の白血球が 10,800/mm³ と中等度の増加を示し好酸球が6.3%と軽度増加していたほか，生化学検査・X線検査で異常を認めなかった。ツ反陰性。

以上より，陰嚢内腫瘍の診断にて術中迅速病理検査をすることとし，3月3日腰椎麻酔下腫瘍摘出術を行った。

手術所見：陰嚢に正中切開を加えると，腫瘤は皮

¹⁾ 現：産業医科大学泌尿器科

²⁾ 現：仙台市立病院泌尿器科

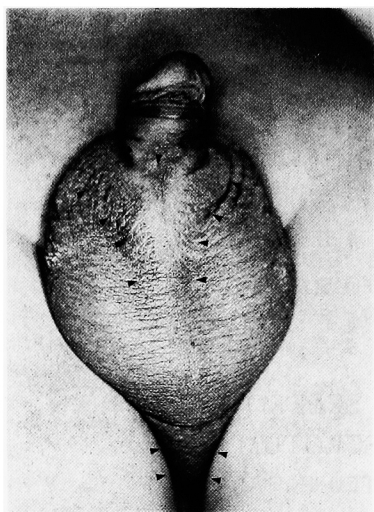


Fig. 1. Tumor of case 1 (▲).

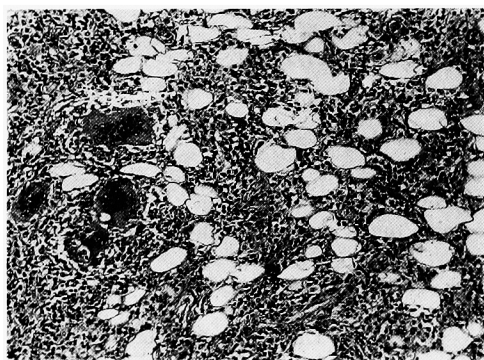


Fig. 2. Pathological finding shows the infiltration of multinuclear giant cells and numerous inflammatory cells, especially eosinophils, in the adipose tissue (H&E, $\times 100$).

膚、周囲組織と癒着しておらず容易に摘出できた。迅速病理検査で悪性所見が認められなかったため腫瘍摘出術のみとした。腫瘍の断面は黄白色で均一であった。

病理所見・脂肪組織の不整な壊死に対して異物巨細胞、形質細胞、リンパ球様細胞が多数浸潤しており、中でも好酸球の浸潤が目立った。コラーゲン線維の増殖も著しく硬化性脂肪肉芽腫と診断された (Fig. 2)。

経過：術後経過は良好で3月13日退院した。9カ月間再発を認めていない。

症例2：29歳、男性

主訴：陰嚢内無痛性腫瘍

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

現病歴：1992年6月20日頃、陰嚢中央部に小豆大の腫瘍を触知した。急激に増大し陰茎根部を取り巻くようになったため7月9日当科を受診し、7月13日手術目的に入院した。

現症：胸腹部および前立腺に異常を認めなかった。陰嚢に発赤・疼痛なく、陰茎根部を取り巻く幅約1.5 cmの弾性硬の腫瘍を認めた。勃起時にも異常を認めなかった。

入院時検査成績：血沈、血液・生化学検査に異常を認めなかった。好酸球は3.0%と増加していなかった。

以上より、原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の診断にて7月20日腰椎麻酔下に腫瘍摘出術を行った。

手術所見：陰嚢正中での腫瘍直上に切開を加え腫瘍を摘除したが、腫瘍の頭側および尾側において境界が不鮮明であった。

病理所見：症例1とほぼ同様の、脂肪組織内の線維化、異物巨細胞・炎症細胞浸潤を伴う肉芽腫であった。やはり好酸球浸潤が目立った。

経過：術後1週間目で抜糸したが、この頃より腫瘍摘除部より尾側の陰嚢正中および陰茎根部の両側に腫瘍を触知するようになった。肉芽腫形成性の変化が周囲の脂肪組織まで広がったと判断し、8月4日再度手術を施行した。初回の腫瘍切除部にも僅かながら肉芽腫の形成が認められたのでこれを含め腫瘍を完全に切除した。4カ月経過した現在再発を認めていない。

考 察

本疾患はパラフィンに代表される異物の注入や外傷などの既往がなく、陰嚢内の脂肪組織に肉芽腫形成反応が起こる原因不明の疾患である。この肉芽腫形成反応は陰嚢内の脂肪組織の存在部に起こるため、海綿体や精巣・精索とは完全に独立しており、最終的には会陰部より陰嚢正中を通り陰茎根部を取り巻く特異的なY字型の肉芽腫ができることが多い。佐藤ら¹⁾は形態的にY字・T字型、陰茎根部中央型、精索または片側陰嚢型に分類しているが、精索に発生したものは厳密には本症と区別されるべきかも知れない。

組織学的には、脂肪組織の不整な壊死に伴う異物巨細胞の出現と多数の好酸球を含む炎症細胞浸潤および線維組織の増殖を示す肉芽腫である。この組織像は、1950年 Smetana²⁾ らが硬化性脂肪肉芽腫 (sclerosing lipogranuloma) と名付けた外傷の後に皮下脂肪組織にできる肉芽腫と似ており、病名の由来となった。しかし、Smetana らの報告の陰嚢を含む陰部に発生した肉芽腫9例には誘引として外傷があり、肉芽腫が前述の特異的形態をしておらず、名称は別として

Table 1. 63 cases of sclerosing lipogranuloma in Japan (~1992)

No.	報告者	年齢	発生部位	好酸球増多	治療法	文献 (年度)
1	石塚他	36	陰囊	(+)	腫瘍摘出	日赤医 32 (1980)
2	高橋他	43	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 71 (1980)
3	高橋他	37	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 71 (1980)
4	穂積他	45	陰囊～単径部	(-)	腫瘍摘出	日泌尿会誌 71 (1980)
5	堀井他	38	陰囊	(+)	不 明	日泌尿会誌 74 (1983)
6	堀井他	32	陰囊	(-)	不 明	日泌尿会誌 74 (1983)
7	牧 他	54	右単径部		高位除率術	泌尿紀要 30 (1984)
8	張 他	39	陰囊～単径部	(-)	腫瘍摘出	日泌尿会誌 76 (1985)
9	小林他	37	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 76 (1985)
10	松井他	34	陰囊～単径部		腫瘍摘出	日泌尿会誌 77 (1986)
11	福山他	50	陰茎根部		生検+消炎剤	日泌尿会誌 77 (1986)
12	続 他	36	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 77 (1986)
13	続 他	39	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 77 (1986)
14	富岡他	39	陰囊	(-)	腫瘍摘出	臨 泌 41 (1987)
15	富岡他	36	陰囊	(-)	腫瘍摘出	臨 泌 41 (1987)
16	富岡他	50	陰囊	(-)	生 検	臨 泌 41 (1987)
17	富岡他	30	陰囊	(-)	腫瘍摘出	臨 泌 41 (1987)
18	富岡他	40	陰囊		腫瘍摘出	臨 泌 41 (1987)
19	吉田他	39	陰茎根部	(-)	腫瘍摘出	泌尿紀要 33 (1987)
20	平野他	43	陰囊	(+) 8%	腫瘍摘出	西日泌尿 49 (1987)
21	佐藤他	79	陰囊～陰茎根部		腫瘍摘出	西日泌尿 49 (1987)
22	那須他	40	陰囊	(-)	腫瘍摘出	日泌尿会誌 78 (1987)
23	江左他	32	陰囊	(-)	腫瘍摘出	日泌尿会誌 78 (1987)
24	江左他	34	陰囊	(-)	生 検	日泌尿会誌 78 (1987)
25	細見他	44	陰茎根部	(+)	生検+消炎剤	日泌尿会誌 78 (1987)
26	畑山他	38	陰茎根部	(+) 10%	部分切除	日泌尿会誌 78 (1987)
27	坪 他	32	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 79 (1988)
28	坪 他	49	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 79 (1988)
29	寺崎他	61	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 79 (1988)
30	服部他	36	陰囊	(+) 35%	腫瘍摘出	泌尿器外科 1 (1988)
31	中田他	37	陰囊		腫瘍摘出	臨 泌 42 (1988)
32	宮崎他	39	陰囊～陰茎根部		腫瘍摘出	西日泌尿 50 (1988)
33	深堀他	33	陰囊	(-)	腫瘍摘出	北関東医 38 (1988)
34	Matsuda	44	陰囊	(-)	生 検	J Urol 140 (1988)
35	Matsuda	45	陰囊	(+) 15%	部分切除	J Urol 140 (1988)
36	Matsuda	29	陰囊	(+) 11%	部分切除	J Urol 140 (1988)
37	Matsuda	37	陰囊	(+) 7%	部分切除	J Urol 140 (1988)
38	Matsushima	36	陰囊		腫瘍摘出	Urol 31 (1988)
39	小泉他	36	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 80 (1989)
40	小泉他	39	陰囊		腫瘍摘出	日泌尿会誌 80 (1989)
41	岩川他	27	陰茎根部	(-)	部分切除	泌尿紀要 35 (1989)
42	佐藤他	42	陰囊	(-)	腫瘍摘出	臨 泌 43 (1989)
43	佐藤他	41	陰囊	(-)	腫瘍摘出	臨 泌 43 (1989)
44	富安他	34	陰茎根部～陰囊	(-)	部分切除	西日泌尿 51 (1989)
45	富安他	39	陰茎根部～陰囊	(+) 8%	生 検	西日泌尿 51 (1989)
46	河原他	37	陰囊	(+) 10.7%	腫瘍摘出	西日泌尿 52 (1990)
47	岡本他	41	陰囊, 両下腿		生 検	日泌尿会誌 81 (1990)
48	岡本他	48	陰茎根部～陰囊	(-)	生検+消炎剤	日泌尿会誌 81 (1990)
49	在原他	36	陰茎根部		腫瘍摘出	日泌尿会誌 81 (1990)
50	北野他	65	陰茎根部	(-)	生検+消炎剤	西日泌尿 53 (1991)
51	北野他	40	陰囊	(+) 7%	生検+消炎剤	西日泌尿 53 (1991)
52	村上他	40	陰囊	(+) 8%	生検+消炎剤	西日泌尿 53 (1991)
53	村上他	55	陰茎根部	(-)	部分切除+消	西日泌尿 53 (1991)
54	武井他	40	陰茎根部	(-)	生検+消炎剤	泌尿器外科 4 (1991)
55	武井他	37	陰茎根部	(-)	生検+消炎剤	泌尿器外科 4 (1991)
56	瀬島他	30	陰茎根部～陰囊	(-)	腫瘍摘出	臨 泌 46 (1992)
57	児島他	49	陰茎根部～陰囊	(-)	腫瘍摘出	泌尿紀要 38 (1992)
58	児島他	36	陰茎根部	(+) 12%	生検+消炎剤	泌尿紀要 38 (1992)
59	増田他	51	右単径部	(-)	腫瘍摘出	泌尿紀要 38 (1992)
60	増田他	51	陰茎根部	(-)	腫瘍摘出	泌尿紀要 38 (1992)
61	増田他	79	陰茎根部	(-)	生 検	泌尿紀要 38 (1992)
62	自験例	40	陰囊	(+) 6%	腫瘍摘出	
63	自験例	29	陰茎根部	(-)	腫瘍摘出	

本疾患を独立した新たな疾患単位として捉える必要がある。

文献上本疾患と思われる本邦における報告は、われわれの検索では1980年の石塚ら³⁾以来1992年までに61例が認められた (Table 1)。

本邦報告61例に、われわれが経験した2例を加えた63例における臨床的特徴を以下に示す。

1. 発症年齢は27~79歳 (平均41.3歳) と壮年に多い。
 2. 腫瘍は陰囊中央部に発生し陰茎根部を取り囲むように成長し、会陰部にも広がりY字型をなすことが多い。
 3. 佐藤ら⁴⁾の報告した症例は腫瘍自覚後20年目に病院を受診したが、記載が明らかな他の30例においては腫瘍を自覚してから1日~1カ月 (平均約1週間) で来院しておりその間急激に増大している。
 4. 記載が明らかな42例においては発赤・疼痛など局所の急性炎症反応を認めない。
 5. 記載が明らかな46例中18例に5%以上の好酸球増多を認めている。
 6. 記載が明らかな61例中39例に摘出術、7例に部分切除術、13例に生検が行われ、2例は抗生剤および消炎剤の投与で経過をみた。
 7. 部分切除、生検、経過観察を行った20例および腫瘍摘出術後再発をきたした3例すべてにおいて腫瘍は消失もしくは縮小し、その経過は数カ月であった。これらの多くは消炎剤が投与されており、保存的治療でも治癒可能と思われる。
 8. 記載が明らかな44例中再発をきたしたのは術後の冷電法を原因とする坪ら⁵⁾の1例と、自験例と似た経過で再発した中田ら⁶⁾、寺崎ら⁷⁾、在原ら⁸⁾の3例に自験例を加えた5例であった。
 9. 記載が明らかな53例中異物の注入や外傷の既往があったものは当然ながら1例も認められなかったが、習慣性の陰茎圧迫の既往を持つ症例⁹⁾、ofloxacinによるアレルギーの関与が疑われる症例⁹⁾の報告があった。
 10. 原因は不明である。
- 原因に関して坪らは術後局所の冷電法を行った症例に再発を認めたこと、他の症例において発症数日前に局所の寒冷暴露があったことより、局所の寒冷暴露が陰囊皮下脂肪組織の内因性壊死を引き起こし、本症発生の誘因になる可能性があるとしている。また、以前より局所の好酸球浸潤に加え末梢血中の好酸球増多を示す症例が多いことよりアレルギーの関与が唱えられていたが¹⁰⁻¹²⁾、何故陰囊だけにアレルギー反応が

起きるかは不明であった。しかし、前述のように ofloxacin によるアレルギーの可能性が疑われる症例が報告されたことや、陰囊のほかにも両下腿にも硬化性脂肪肉芽腫が発症した症例¹³⁾があるなどますますアレルギーの関与が疑われるところである。一方、自験例を含めた再発例は、陰囊中央部の腫瘍を切除した後に、陰茎根部や恥骨上、さらには会陰側にも腫瘍が形成されており、病変が周囲へ進行している時期に形成された肉芽腫だけを切除したために再発をきたしたのかもしれないが、手術という機械的刺激が病変拡大に寄与した可能性も考えられる。いずれにせよ、前述の寒冷暴露やアレルギーのほか微小外傷、感染などが誘引となることが否定できず、原因の検討には更なる症例の積み重ねが必要である。

治療法は部分切除・生検を行った症例においても抗炎症剤の使用により数カ月で消失もしくは軽快していることより、保存的治療を行ってもよいと思われるが、多くの症例で腫瘍切除が行われているのが実情である。今回の再発例の経験から、腫瘍切除を行うのであれば広汎に周囲の脂肪組織も切除すべきと思われる。

われわれは、再発した腫瘍までも観血的に摘出したが、これは早期の治療を望んだ患者の希望によるものであった。

結 語

われわれが経験した原発性陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の2例を報告し、本邦報告63例の文献的考察を加えた。

文 献

- 1) 佐藤直秀, 桜山由利, 石川堯夫, ほか: 原発性陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の2例. 臨泌 43: 525-528, 1989
- 2) Sumetana HF and Bernhard W: Sclerosing lipogranuloma. Arch Pathol 50: 296-325, 1950
- 3) 石塚栄一, 藤井 浩, 岩崎 皓, ほか: 悪性腫瘍を思わせた陰囊内の肉芽腫. 日赤医 32: 68, 1980
- 4) 佐藤伸二, 上原康雄, 中牟田誠一: 陰囊, 陰茎の Sclerosing Lipogranuloma の1例. 西日泌尿 49: 1683, 1987
- 5) 坪 俊輔, 野々村克也, 小林真也, ほか: 原発性陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の2例. 日泌尿会誌 79: 155-159, 1988
- 6) 中田誠司, 海老原和典, 浦野悦郎, ほか: 陰囊内硬化性脂肪肉芽腫. 臨泌 42: 373-375, 1988
- 7) 寺崎 博, 土岐直隆, 下村貴文, ほか: 陰囊内に発生した硬化性脂肪肉芽腫の1例. 日泌尿会誌

79: 1734, 1988

- 8) 在原和夫, 増田愛一郎, 稲土博右, ほか: 陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 日泌尿会誌 81: 658, 1990
- 9) 河原 優, 清水保夫, 大田修平, ほか: Ofloxacin 点鼻薬アレルギー症状に併発した陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 西日泌尿 52: 1639-1643, 1990
- 10) 堀井泰樹, 松田公志, 飛田収一, ほか: 特異な形態を呈した陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の2例. 日泌尿会誌 74: 1482, 1983
- 11) 富岡 進, 布施秀樹, 脇坂正美, ほか: 陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の5例. 臨泌 41: 911-914, 1987
- 12) 吉田全範, 北村慎治, 藤永卓治: 陰嚢内に発生した硬化性脂肪肉芽腫の1例. 泌尿紀要 33: 137-140, 1987
- 13) 岡本圭生, 福山拓夫, 岡本栄一, ほか: 両側下肢にも腫瘤を認めた陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 日泌尿会誌 81: 332, 1990

(Received on February 1, 1993)
(Accepted on September 11, 1993)